翼突下顎隙に生じた神経鞘腫の1例

谷口佳孝¹⁾・占部一彦²⁾・平岡慎一郎¹⁾
木全正彰¹⁾・北村龍二¹⁾

A case of schwannoma in the pterygomandibular space

TANIGUCHI Yoshitaka¹⁾・URABE Kazuhiko²⁾・HIRAOKA Shinichiro¹⁾
KIMATA Masaaki¹⁾・KITAMURA Ryuji¹⁾

Abstract: Schwannoma is a benign tumor derived from the Schwann cells. This tumor is relatively rare in the oral and maxillofacial region, and schwannoma in the pterygomandibular space is extremely rare. This report describes a case of schwannoma in the pterygomandibular space. A 58-year-old woman presented with swelling and discomfort of the lateral oropharynx on the right side. Magnet resonance imaging showed a T2 high-signal-density mass, measuring 35 mm × 30 mm, in the pterygomandibular space. We performed a biopsy under general anesthesia. Histopathologically, the mass was diagnosed as a schwannoma.

The tumor was surgically removed under general anesthesia. There was no evidence of recurrence 2 years post-operatively.

Key words: schwannoma (神経鞘腫), pterygomandibular space (翼突下顎隙)

緒 言

神経鞘腫は有髄神経のシュワン細胞に由来する良性腫瘍で、頭頸部や四肢が好発部位である¹⁾。一方、口腔領域での発生頻度は比較的低く、舌、頬粘膜、口蓋、口底等に生じるとされる^{1, 2)}が、翼突下顎隙での発生は極めてまれである³⁾。

今回われわれは翼突下顎隙に生じた神経鞘腫の1例を経験したのでその概要を報告する。

症 例

患 者: 58歳, 女性。

初 診: 2004年2月。

主 訴: 右側咽頭部の違和感。

既往歴および家族歴: 特記すべき事項なし。

現病歴: 2004年2月上旬に右側咽頭部に違和感を自覚したため、某耳鼻咽喉科を受診し、投薬処置を受けた。しかし、症状の変化を認めなかった。そのため、2月中旬に某歯科を受診し、精査および加療目的に当科を紹介された。

現 症:

全身所見: 体格は中程度で栄養状態は良好であった。

口腔外所見: 頬部や頸部に腫脹は認めなかった。

口腔内所見: 視診では右側中咽頭側壁前方部に粘膜の発赤を伴う軽度のび慢性腫脹を認め、触診にて境界が比較的明瞭で20×25mm大の弾性硬の腫瘤を触知した。表面粘膜にびらんや潰瘍はなく、また同部の圧痛もなかった。嚥下時に右側咽頭部の軽度の違和感は認めたものの、三叉神経領域の知覚異常はなかった。味覚、嚥下、構音障害などの神経脱落症状もなく、開口量は47mmで開口障害もなかった。

MRI所見: 右側翼突下顎隙に上下径35mm、前後径30mmの境界明瞭な腫瘤を認めた。病巣は分葉状で類球形を呈し、脂肪抑制T2強調画像にて内部均一な高信号を示した。この腫瘤により外側翼突筋は上方に、内側翼突筋は内側前方に圧排されていた(写真1)。

造影CT所見: 右側翼突下顎隙に35×30mm大の境界明瞭で、内部に若干の造影効果を有する腫瘤陰影を認めた(写真2)。

¹⁾ 労働者健康福祉機構 関西労災病院口腔外科
(主任: 北村龍二部長)

²⁾ 医療法人徳洲会 八尾徳洲会総合病院歯科口腔外科
(主任: 占部一彦部長)

¹⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Kansai Rosai Hospital (Chief: KITAMURA Ryuji)

²⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Medical Foundation Tokusyu-kai, Yaotokusyukai General Hospital (Chief: URABE Kazuhiko)

受付日: 2008年7月8日

採択日: 2009年6月23日

写真1 MRI写真 (A：水平断, B：前頭断)

右側翼突下顎隙に境界明瞭, 脂肪抑制 T2 強調画像にて高信号を呈する分葉状の球状陰影. 内側翼突筋 (矢頭) は内方に, 外側翼突筋 (矢印) は上方に偏位している.

写真2 CT写真 (A：水平断, B：前頭断)

右側翼突下顎隙に内部に若干の不均一な造影性を示す境界明瞭な腫瘍を認める (矢頭).

臨床診断名：右側翼突下顎隙に生じた腫瘍.

処置および経過：2004年6月, 本患者は嘔吐反射が強かったため, 全身麻酔下に生検を施行した. 右側下顎枝前縁に粘膜切開を加え, 粘膜下組織を剥離すると弾性硬で被膜を有する腫瘍を認めた. 同腫瘍の試験切除結果, 神経鞘腫の病理組織学的診断を得た. 2004年8月, 全身麻酔下に

腫瘍摘出術を施行した. 右側下顎第二大臼歯後方から下顎枝前縁を翼突下顎縫線に沿って粘膜切開を加え, 粘膜下組織を剥離していくと, 内側翼突筋と下顎枝内側の間に線維性の被膜に被包された腫瘍が観察された. 腫瘍を前方に牽引しながら周囲より鈍的に剥離し, これを摘出した. なお下顎枝内面骨膜や内側翼突筋, 外側翼突筋, 蝶下顎靱帯,

写真3 病理組織像 (H-E 染色)

A : いわゆる観兵式様構造を呈する Antoni A 型の部分が腫瘍の大半を占めたが、一部に腫瘍細胞の密度がやや疎で不規則な走向をする Antoni B 型の部分を認めた (矢印) (弱拡大)。

B : 腫瘍細胞は卵円形あるいは紡錘形核を有する胞体境界不明瞭な紡錘形を呈した (強拡大)。

写真4 免疫染色像 (抗 S-100 抗体)

A : S-100 蛋白は腫瘍内で陽性を示した (弱拡大)。

B : Antoni A 型 (強拡大)。

C : Antoni B 型 (強拡大)。

下歯槽神経等の周囲軟組織、神経束との癒着はなく容易に摘出することができた。摘出時に翼突筋静脈叢からの出血は認めず、止血に難渋することはなかった。また摘出後の手術野の前方に舌神経の露出を認めたものの、腫瘍と舌神経に連続性はなかった。術後下唇、オトガイ部、舌の知覚異常は認めず、また術後に出現していた開口障害も1か月で消失した。術後2年以上経過した現在も再発はみられていない。

摘出標本所見：腫瘍は黄白色、表面平滑で薄い線維性被膜に覆われていた。腫瘍の大きさは $37 \times 35 \times 30\text{mm}$ で、一部は分葉状を呈しており、弾性硬であった。断面は黄白色を呈し充実性であった。

病理組織学的所見：卵円形あるいは紡錘形の核を有する

紡錘形細胞が束状配列を示しながら密に増生していた。腫瘍細胞の核が横隊する観兵式様構造を認めた。一部に腫瘍細胞がやや疎な部分もみられ、細胞密度に違いが観察されたが、明らかな核分裂像は観察されなかった (写真3)。免疫染色の結果、S-100 蛋白は陽性 (写真4)、c-kit (CD117)、 α SMA (alpha-smooth muscle actin)、CD (cluster of differentiation) 34、Desmin、CK (Cytokeratin) はいずれも陰性であった。

病理組織学的診断：神経鞘腫。

考 察

本症例の発生部位である翼突下顎隙は外側を下顎枝、内側を内側翼突筋、上方を外側翼突筋、後方を耳下腺、さら

表1 本邦における翼突下顎隙に発生した腫瘍性病変の報告例

発表者	発表年	年齢/性別	大きさ	臨床症状	生検	アプローチ	病理組織学的診断
古沢ら ³⁾	1986	22/F	5×6×5 cm	上顎臼歯部の違和感	あり	口腔内切開	神経鞘腫
真田ら ⁹⁾	1989	66/F	2.7×2.5×2.4cm	臼後部の腫脹	あり	口腔内切開	周辺性エナメル上皮腫
水城ら ⁴⁾	1989	42/F	直径1.5cm	開口障害, 顎関節部疼痛	なし	耳前部切開	滑膜肉腫
市川ら ⁶⁾	1997	8/M	直径6 cm	頬部の腫脹と疼痛	あり	耳前部切開	横紋筋肉腫
佐藤ら ¹⁰⁾	1998	67/M	4×2×4cm	中咽頭側壁前方部の腫脹	なし	口腔内切開	類表皮嚢胞
宮嶋ら ⁷⁾	2000	19/M	(記載なし)	上顎智歯部の腫脹, 疼痛	あり	(手術施行せず)	横紋筋肉腫
平島ら ⁵⁾	2003	51/M	(記載なし)	開口障害, 顎関節部疼痛	あり	(手術施行せず)	腺癌
笠井ら ¹¹⁾	2004	40/F	3.5×3.5×2.5cm	上顎結節周囲の腫脹と疼痛	あり	顎下部切開	多形性腺腫
竹内ら ⁸⁾	2007	78/M	直径2 cm	下歯槽神経知覚鈍麻	あり	(手術施行せず)	異型バーキットリンパ腫
自験例	2008	58/F	3.7×3.5×3.0cm	中咽頭側壁前方部の違和感	あり	口腔内切開	神経鞘腫

に前方を頬筋, 上咽頭収縮筋, 翼突下顎縫線によって囲まれた間隙で下顎神経や顎動脈の諸枝, 翼突筋静脈叢などが存在する。またその周囲には副咽頭間隙, 側頭窩, 側頭隙, 耳下腺隙, 下顎後隙, 翼突口蓋隙などが存在し, 互いに交通している。このためさまざまな組織由来の多彩な病変が発生あるいは進展しうが, 翼突下顎隙内に発生した腫瘍性病変に関する報告は比較的少なく, 今回われわれが渉猟し得た本邦における1975年以降の報告例は自験例を含めて10例であった(表1)。この領域に発生した病変の臨床症状には, 悪性の場合には腫瘍浸潤による顎関節部^{4, 5)}, 頬部⁶⁾, 上顎智歯部⁷⁾等での疼痛が必発している。それ以外にも開口障害^{4, 5)}や三叉神経の知覚異常⁸⁾が報告されており, 腫瘍の大きさに関係なく自覚症状を認めた。一方, 良性疾患であれば, 病変がある程度まで増大しないと違和感や腫脹などの自覚症状を認めず, 医療機関を受診しないことも少なくない^{3, 9~11)}。古沢ら³⁾は細菌感染や腫瘤増大による表面粘膜の咬傷がなければ疼痛は出現しないとしている。

また半数にあたる5例が悪性疾患であり, その病理組織学的診断は肉腫^{4, 6, 7)}, 腺癌⁵⁾, リンパ腫⁸⁾と多岐にわたっていた。病変が小さく全摘出により病理組織診断を得た例⁴⁾と局所麻酔下で生検を試みたが嘔吐反射が強く検査を中断した1例⁵⁾以外の8例で確定診断を目的とした試験切除を行っていた。翼突下顎隙に生じる腫瘍では悪性腫瘍の可能性も少なくないことから, 組織生検は重要であり, 自験例のように嘔吐反射が強い場合では全身麻酔下の生検を行い, 治療計画を立案すべきと考えられる。

神経鞘腫は比較的まれな良性腫瘍で, その25-45%は頭頸部に発生し, 頭蓋内外や副咽頭間隙においては聴神経や三叉神経, 交感神経を起源とするものが多い¹²⁾。しかし, 顎口腔領域での発生は比較的まれで全身に発生する神経鞘

腫の0.02%¹³⁾とされている。そのなかでも石井ら²⁾は舌での発生が最も多く40-50%を占め, 以下, 口底, 下顎骨, 口蓋, 歯肉が続くと報告している。しかし, 自験例のように翼突下顎隙での発生については, 古沢ら³⁾が類似した症例を報告しているが, それ以外に欧文での報告例は渉猟し得なかった。これは佐藤ら¹⁰⁾の指摘のごとく, 腫瘍の発生場所としての概念がないことによる可能性がある。一方, 翼突下顎隙に接して上方の領域である側頭下窩での神経鞘腫の報告例についてRoh¹²⁾は自験例以外にも7例^{14~20)}を渉猟し考察しているが, いずれも翼突下顎隙に存在する病変ではなかった。また翼突下顎隙の内下方の領域である副咽頭間隙での神経鞘腫の発生は多形腺腫に次ぎ全体の22.6%を占め²¹⁾, 由来神経の多くは迷走神経とされる²²⁾。

本腫瘍の大きなものでは内部で嚢胞形成や出血をみることがある²³⁾が, 多くは被膜に覆われており, 周囲組織からの剥離が容易であるため, 外科的摘出が選択される。再発はなく予後は良好とされている²⁾。一般に翼突下顎隙に局限した病変であれば口腔内から下顎枝前縁切開による口内法^{3, 9, 10)}が可能である。しかし, 副咽頭間隙や側頭下窩に進展した場合は解剖学的に複雑であり, 摘出方法の考慮が必要である。これらの進展症例に対して, 笠井ら¹¹⁾, 飯島ら²⁴⁾は耳前部から下顎下縁にかけての皮膚切開ののち, 角部での下顎骨離断を行うことで腫瘍にアプローチし, 摘出後に金属プレートにて骨接合を行っている。術前の画像診断により側頭下窩や副咽頭間隙に及んでいる場合や耳下腺由来の可能性があれば経皮的なアプローチが必要であると考えられた。

神経鞘腫の由来神経については, 術中所見や腫瘍摘出後の神経脱落症状により神経鞘腫の由来神経が検討されることが多いが, 不明なものも少なくない²⁵⁾。摘出後の術野に舌神経の露出をみたものの, 術中に腫瘍との連続性は確認

されなかった。また術前はもとより術直後から舌、下唇、オトガイや頬粘膜に知覚鈍麻を認めなかったため本症例では由来神経を断定することができなかった。

結 語

今回われわれは、58歳女性の右側翼突下顎隙に発生した神経鞘腫の1例を経験したので、文献的考察を加え、その概要を報告した。

謝辞

稿を終えるにあたり、本症例の病理組織学的診断に際して御助言、御指導を賜りました関西労災病院検査科部長 星田義彦先生に深謝致します。

引 用 文 献

- 宮崎 正：口腔外科学。松矢篤三，白砂兼光；第2版，医歯薬出版，東京，2000，37頁。
- 石井純一，神谷貴充，他：口腔顎顔面領域の神経鞘腫 — 臨床的病理組織学的検討 —。日口外誌 47: 89-92 2001。
- 古沢清文，浦出雅裕，他：下顎枝内面に著明な骨吸収を示した神経鞘腫の1例。口科誌 35: 925-929 1986。
- 水城春美，戸高勝之，他：翼突下顎隙に発症した滑膜肉腫の1例。口腔腫瘍 1: 35-40 1989。
- 平島惣一，富永和宏，他：開口障害を主訴とし顎関節症と鑑別を要した炎症および腫瘍の2症例。九州歯会誌 57: 163-167 2003。
- 市川真弓，宮手浩樹，他：翼突下顎隙にみられた横紋筋肉腫の1例。日口外誌 43: 407-409 1997。
- 宮嶋洋二郎，遊佐 浩，他：診断に苦慮した翼突下顎隙に発生した横紋筋肉腫の1例。日口外誌 13: 122-126 2000。
- 竹内 梓，松下文彦，他：下歯槽神経知覚鈍麻を初発症状とした異型パーキットリンパ腫の1例。日口外誌 53: 618-622 2007。
- 真田英太郎，長谷川敏美，他：翼突下顎隙に発生した周辺性エナメル上皮腫の1例。免疫組織化学的検討。日口外誌 35: 1599-1605 1989。
- 佐藤 仁，福田喜安，他：翼突下顎隙に発生した類表皮嚢胞の1例。日口外誌 44: 76-78 1998。
- 笠井唯克，桑島広太郎，他：翼突下顎隙に認められた多形性腺腫の1例。日口外誌 50: 384-387 2004。
- Roh, J.L.: Removal of infratemporal schwannoma via transmandibular transpterygoid approach. Eur Arch Otorhinolaryngol 262: 428-431 2005。
- Bruce, K.W.: Solitary neurofibroma (Neurilemmoma, Schwannoma) of the oral cavity. J Oral Surg 7: 1150-1159 1954。
- Couch, C.D.: Neurilemmoma of the head and neck. J Oral Surg 12: 19-28 1954。
- Whitlock, R.I., McCrea, R.S., et al.: Neurilemmoma in the temporal fossa. Report of a case. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 24: 291-300 1967。
- Arena, S., Hilal, E.Y., et al.: Neurilemmomas of the infratemporal space: report of a case and review of the literature. Arch Otolaryngol 102: 180-184 1976。
- Jones, H.S.: Benign schwannoma involving the infratemporal fossa and orbit. Laryngoscope 93: 200-203 1983。
- Gibbons, S.D., Wiesenfeld, D., et al.: Removal of a retromandibular schwannoma via temporal approach. J Oral Maxillofac Surg. 49: 191-193 1991。
- Kragh, L.V., Soule, F.H., et al.: Benign and malignant neurilemmoma of the head and neck. Surg Gynecol Obstet 111: 383-389 1992。
- Krishnamurthi, S., Holmes, B., et al.: Schwannomas limited to infratemporal fossa: report of two cases. J Neurooncol 36: 269-277 1998。
- 檜尾明憲，中尾一成，他：副咽頭間隙腫瘍31例の検討。日耳鼻 107: 1053-1059 2004。
- 千々和秀記，坂本菊男，他：副咽頭間隙腫瘍の臨床的検討。耳鼻臨 101: 383-386 2008。
- 石川梧朗監修：口腔病理学Ⅱ。第3版，永末書店，京都，1986，590頁。
- 飯島 響，栗田 浩，他：副咽頭間隙に生じたダンベル型神経鞘腫の1例。日口外誌 52: 720-723 2006。
- 小田明子，高橋裕子，他：副咽頭間隙腫瘍の一例 — 組織型，大きさと手術法について —。耳鼻 38: 236-240 1992。